

## 원위부 총담관 결석으로 오인된 결석을 동반한 총담관류 치료

곽태영, 박창환, 엄석현, 황홍석, 정덕원, 서지영, 김영성, 곽동협

곽병원 내과

### Choledochoceles containing a stone mistaken as a distal common bile duct stone

Tae Young Kwak, Chang Hwan Park, Seok Hyeon Eom, Hong Suk Hwang, Duk Won Chung, Ji Young Seo, Yeong Sung Kim, Dong Hyup Kwak

*Department of Internal Medicine, Kwak's Hospital, Daegu, Korea*

A choledochocoele is an expanded sac of the duodenal side of the distal common bile duct (CBD), and is categorized as a type III choledochal cyst. Unlike other choledochal cysts, it can be easily overlooked because of its very low prevalence, non-specific clinical symptoms, and lack of distinctive radiological findings. However, a patient having a repeated pancreaticobiliary disorder with an unknown origin, frequent abdominal pain after cholecystectomy, or repeated non-specific gastrointestinal symptoms can be suspected as having a choledochocoele, and a more accurate diagnosis can be achieved via endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) and endoscopic ultrasound. Because it rarely becomes malignant, a choledochocoele can be treated via endoscopic sphincterotomy (EST) and surgical treatment. The authors were able to diagnose choledochocoele accompanied by a stone in a patient admitted to the authors' hospital due to cholangitis and pancreatitis. The patient's condition was suspected to have been caused by a distal CBD stone detected via multiple detector computed tomography and ERCP, and was successfully treated via EST.

**Keywords:** Choledochocoele; Gall stone; Endoscopic retrograde cholangiopancreatography

## 서 론

총담관류(choledochocoele)는 원위부 총담관의 십이지장 벽 내 부위가 낭상으로 확장되어 십이지장 내로 돌출되는 형태의 담관낭종의 한 종류이다[1,2]. 전체 담관낭종 중 1.4-5% 정도로 발생 빈도도 매우 낮고, 특징적인 검사실 소견이 없어 타 질병으로 오인되기가 쉽다[2-4]. 복부초음파 검사(abdominal ultrasonography)나 복부 컴퓨터단층촬영(computed tomography, CT)으로 확진이 어려워 간과되기

쉬우나, 최근 내시경역행췌담관조영술(endoscopic retrograde cholangiopancreatography)과 내시경초음파(endoscopic ultrasound) 등의 검사가 보편화되면서 진단이 용이해졌고, 다른 담낭 낭종에 비해 악성화가 적어 수술적 제거 없이 내시경조임근절개술(endoscopic sphincterotomy)만으로 치료한 보고들이 증가하고 있다[3,5]. 총담관류의 발생 빈도도 낮지만, 그들 중 17%만이 결석을 동반한 총담관류로 보고되고 있으며[2], 국내보고는 4예 정도에 불과하다[5].

저자들은 원위부 총담관 결석에 의한 급성 담도염 및 췌장염으로 추정된 예에서 다중검출기 컴퓨터단층촬영(multiple detector computed tomography)과 내시경역행췌담관조영술로 총담관류 및 동반한 낭종 내 결석을 진단하고, 내시경조임근절개술로 치료한 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

Received: June 11, 2014, Revised: July 18, 2014,  
Accepted: July 29, 2014

Corresponding Author: Yeong Sung Kim, Department of Internal Medicine, Kwak's Hospital, 531 Gukchaebosang-ro, Jung-gu, Daegu 700-734, Korea  
Tel: +82-53-605-3607, Fax: +82-53-605-3754  
E-mail: cifwill@hanmail.net

## 증례

75세 여자 환자가 내원 3일 전부터 발생한 상복부 통증, 발열 및 구토를 주소로 내원하였다. 내원시 혈압 140/100 mmHg, 맥박수 76회/분, 호흡수 20회/분, 체온 38.3℃였다. 진찰소견에서 우상복부 압통과 경미한 공막 황달이 관찰되었다.

말초혈액검사서 백혈구 16,060/mm<sup>3</sup>, 혈색소 13.2 g/dL, 혈소판 155,000/mm<sup>3</sup>, 적혈구침강속도 31.0 mm/hr였다. 혈청생화학검사서 총빌리루빈 5.58 mg/dL, 총단백 7.8 g/dL, 알부민 4.33 g/dL, 아스파르테이트아미노전이효소 143 IU/L, 알라닌아미노전이효소 59 IU/L, 감마-글루타밀전이효소 475 IU/L, 알칼리인산분해효소 195 IU/L, 아밀라아제 674 U/L, 리파제 2,089 U/L, CA19-9 6,001.63 U/mL였다. 복부초음파 검사에서 확장된 총담관과 원위부 결석 및 경미한 췌관의 확장이 관찰되어, 총담관 결석을 동반한 담관염 소견을 보였다. 십이지장내시경 소견에서 낭상으로 팽대된 정상점막의 유두부가 보였고 그 원위부에서 개구부를 확인할 수 있었다(Fig. 1). 복부 CT에서는 원위부 총담관에 1.5 cm 크기의 낭종 형태와 그 내강에 1.3 cm 크기의 결석이 관찰되었고(Fig. 2), 낭종 직상방의 총담관은 짧은 분절의 협착소견과 확장된 총담관 소견이 관찰되었다. 조영용 카테터로 압박시 표면은 부드러웠으나 “pillow sign”은 저명하지 않았다. 내시경역행췌담관 조영술 소견에서 유두 개구부에 조영제 주입시 유두부가 더욱 팽창되었으며, 낭종 내 결손음영이 발견되어 결석을 동반한 총담관류로 진단하였다(Fig. 3).

총담관류 및 낭종 내 결석을 치료하기 위해 유두 개구부로 내시경조임근절개술을 시행하여 유두괄약근을 절개하였다.

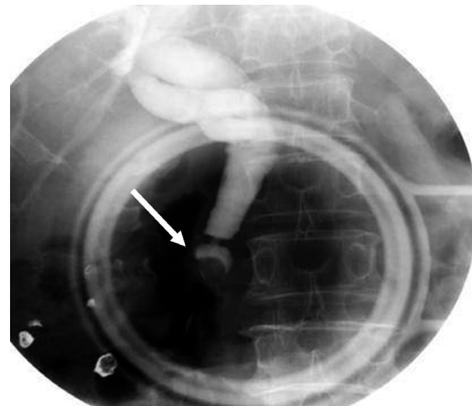


**Fig. 1.** Duodenoscopic finding of cystic dilatation of the ampulla of the Vater.

하지만 낭종 내 결석으로 인하여 낭종의 완전개방이 어려워 재차 침형절개도(needle knife)로 누두절개술(infundibulotomy)로 낭종을 완전개방하여 1.3 cm 크기의 갈색 결석을 제거하였다(Fig. 4). 결석 제거 후 개방된 총담관류 내벽의 조직검사를 시행하여 섬유화를 동반한 염증이 혼재된 담관조직이 확인되었으며, 세포이형성이나 악성세포는 발견되지 않았다. 이후 환자는 항생제 및 보존적 치료로 담도염 및 췌장염이 호전되었으며, 2주 경과 후 시행한 추적 내시경역행췌담관 조영술에서 확장된 총담관의 내강은 감소되었고 담즙 배출은 양호하였다(Fig. 5). 본 증례는 총담관류에 내강결석, 담도염 및 췌장염 등의 합병증이 동반된 점, 크기가 작지 않은 점, 개방된 총담관류 내벽 조직검사서 담도조직이나 췌장 조직 등을 고려하여 외과적 절제를 권하였으나 고령인 환자가 외과적 수술을 거부하여, 현재는 외래에서 추적 관찰 중이다.



**Fig. 2.** Computed tomography finding of a high attenuation stone (arrow) at the distal common bile duct.



**Fig. 3.** Initial endoscopic retrograde cholangiopancreatography finding of cystic dilatation of the terminal portion (arrow) of the distal common bile duct with a stone.



Fig. 4. Stone removed using a basket after endoscopic sphincterotomy.

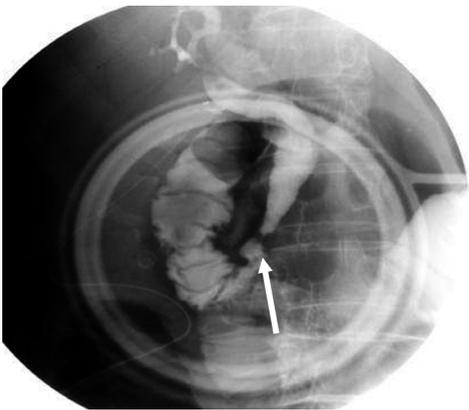


Fig. 5. Follow-up endoscopic retrograde cholangiopancreatography findings of decreases in the diameters of the common bile duct and the choledochocoele (arrow).

## 고찰

총담관류는 Todani 등[1]의 담관낭종의 분류 중에서 type III에 해당되며, 원위부 총담관의 십이지장 벽 내 부위가 낭상 확장되어 십이지장 내로 돌출되는 형태이다[2]. 1940년 wheeler가 처음 보고한 이래로 국외에서 다수 보고되고 있으나 발생빈도는 전체 담관낭종 중 1.4-5%로 극히 드물다[2-4]. 국내에서는 1966년 Chang 등[6]이 처음으로 총담관류 1예를 보고한 후 총담관류와 동반된 췌장염, 종양 등을 포함한 16예, Kim 등[5]이 보고한 총담관류 내 결석을 동반한 4예 등 20여 예 정도 보고되었다.

담관류의 발생기전은 명확하지 않아 선천적으로 오디조임근의 기능이상으로 인해 생기는 선천적 담도기형이라는 주장과[7] 팽대부의 섬유화나 염증, 결석, 협착으로 인한 원위

부 총담관 내부점막의 확장이 원인이라는 주장도 있어[8] 선천적, 후천적 요인 모두가 연관될 것으로 생각된다[3,9].

Sarris와 Tsang [2]은 총담관류를 해부학적 형태에 따라 2가지 형태로 분류하였다. A형은 67% 정도로 담관과 췌관이 서로 분리되어 십이지장의 낭종 내로 개구하는 형태이며, 낭종 내에서 담관과 췌관이 공동으로 개구하면 A1형, 서로 구별되어 낭종 내로 연결되면 A2형, 크기가 작고 전체적으로 벽 내 부위에만 있으면 A3형이다. B형은 21% 정도로 총담관류가 정상 팽대부와는 별도로 십이지장 내의 개실 형태로 낭상 돌출되는 형태이다. 본 환자의 경우 팽대부가 총담관류 내로 개구하는 형태로 A형에 해당되나, 담관과 췌관의 낭종 내 공동 개구는 명확하게 구분되지는 않았다.

임상적으로 다른 담관낭종의 발생빈도는 여성이 3배 정도로 높고, 10대 이전이 다수인 것에 비해서[4] 총담관류의 주된 발생연령은 40세 전후이나 전 연령층에서 발생되며, 뚜렷한 성별의 차이도 보이지 않는다[2,10].

무증상의 경우도 많으나, 증상을 동반한 경우 대부분이 간헐적인 상복부 통증과 구역, 구토를 보여 이는 담도성 동통과 유사하며, 일부는 황달 및 췌장염 등의 증상과 담도결석, 담도염, 담도성 간경화 등의 합병증을 보인다[2,9,11]. 총담관류 내 결석동반은 약 17%에서 발견되며 이는 낭종 내의 만성적 담즙정체에 의한 것으로 담낭결석과는 연관성이 없다[2].

또 총담관류의 악성화는 담관류 내벽의 장상피화생(intestinal metaplasia)으로 인해 발생된다고 알려져 있으나[12], 보고된 악성화 빈도는 2.5% 정도로[3] 다른 담관낭종의 4.2-28% 악성화 빈도에 비해 낮다[4,13].

Ohtsuka 등은 2,826예에서 내시경역행췌담관조영술 시행 후 진단된 11예의 총담관류 중 3예에서 확인된 팽대부 주변 암을 보고하면서 증상을 동반한 경우나 담즙 내 높은 아밀라제 수치를 보인 예에서 악성화 발견율이 높으며, 총담관류에 정체된 아밀라제가 점막의 악성화에 관여한다고 주장하였다[12]. Horaguchi 등[14]은 총담관류 환자 21예 중 3예에서 확인된 담관암 및 담낭암을 보고하면서 총담관류의 형태적 모양보다는 오디조임근의 기능장애로 인한 췌액의 담도 내 역류가 악성화에 관여한다고 추측하였다.

총담관류의 진단은 증상이 모호한 경우가 많고, 병변의 위치가 진단하기 어려운 곳에 있어 간과되기 쉽다고 알려져 있다[7]. 진단을 위한 복부초음파검사는 낭종 내 두터워진 벽과 석회화 소견을 관찰할 수 있으나, 병변의 위치와 검사의 한계성이 있어 그 정확도는 31%로 낮다[3]. 저자들 역시 복부초음파검사에서는 확장된 총담관과 원위부 담관에서 결석

을 확인하여 원위부 담관결석으로 인한 담도염으로 추정하였으며, 총담관류는 간과하였다.

복부 CT나 자기공명췌담관조영술(magnetic resonance cholangiopancreatography)은 췌담관의 해부학적 관계와 총담관류 위치, 크기 등에 대해 보다 더 자세한 정보를 제공하여 복부초음파검사보다 정확하고, 내시경초음파나 내시경역행 췌담관조영술 보다 비침습적이어서 유용하다[3,15].

내시경역행췌담관조영술은 총담관류 진단과 치료에서 가장 널리 사용되는데, 진단적 특이도는 97%로 팽대된 유두부와 조영제로 충만된 총담관류의 형태, 담관 및 췌관과의 관계, 동반된 결석의 유무 등을 확인할 수 있다[9,10]. 내시경역행췌담관조영술 검사에서 낭상형태로 팽대된 정상점막의 유두부가 관찰되며, 조영용카테터로 눌렀을 때 쉽게 눌러지고 복원되는 “pillow sign”과 조영제 주입시 팽창되는 유두부 등이 관찰되면 총담관류를 의심할 수 있다[5,7]. 저자들의 경우에도 이미 팽대된 유두부는 확인할 수 있었으나 카테터로 눌렀을 때 표면은 부드러웠으나 많이 눌러지지 않았는데, 이는 총담관류 내에 큰 결석을 동반하였기 때문으로 보인다.

내시경초음파는 낭종 내의 결석, 찌꺼기, 점막덩어리 등의 유무를 볼 수 있으며, 낭종과 십이지장 근육층과의 분리유무, 담관 및 췌관과의 관계 등에 대해 더욱 자세한 정보를 제공하므로 치료방법을 결정하는데 유용하다[3,16].

총담관류의 감별진단은 유두부 종양, 유두부 감돈결석, 십이지장 점막하종양, 중복 십이지장낭 등이 있다. 특히 본 증례의 경우처럼 총담관류 내 결석을 동반한 경우는 원위부 총담관 결석에 의한 유두부 감돈결석의 경우와 유사하여 복부초음파검사나 CT로는 구분이 어렵다. 유두부 감돈결석의 경우는 동반한 유두염으로 유두의 개구부를 중심으로 발적, 부종, 미란 등의 염증 소견이 보이나 총담관류에서는 개구부가 상대적으로 정상소견을 보인다[7,17,18]. 또한 내시경역행췌담관조영술로 조영제 주입시 유두부 감돈결석의 경우 원위부 결석음영의 폭만큼 연속적인 총담관 확장소견이 보이나, 총담관류 내 결석의 경우는 낭종의 형태가 뚜렷해지며, 낭종 내 결석음영과 상부 총담관과의 연결에 연속성이 없음을 확인할 수 있다[7,18].

총담관류의 치료는 총담관류를 제거하고, 동반한 합병증을 치료하여 증상을 완화하며 추후 주변조직의 악성화를 예방하는데 있다. 무증상의 총담관류는 추적관찰할 수 있으나, 증상이 있는 경우는 제거 혹은 장관내 배액술을 시행하여야 한다[3]. 장관내 배액술로는 내시경조임근절개술이 주로 이용되는데[7,19] 낭종을 개방하면서 오디조임근을 절개하여 증가된

췌담관의 압력을 낮춰 동반한 합병증을 치료한다. 동시에 낭종 내벽의 조직검사를 시행하여 세포 내벽 점막의 변화를 확인하여 추가적인 외과적 절제술을 결정할 수 있게 한다.

Venu 등[7]은 8예의 총담관류 중 합병증이 없는 5예의 경우 내시경조임근절개술을, 황달 및 췌장염을 동반한 예들은 외과적 제거술을 시행하였다. 이후, 수술 후 합병증은 없었고 보고하면서, 총담관류의 크기가 작고 무증상의 예는 내시경적 치료를, 크기가 크고 합병증이 있는 환자에서는 외과적 절제를 권고하였다.

Schimpl 등[20]은 총담관류에서 췌장액 및 십이지장액에 의한 만성적인 염증에 의해 세포이형성과 악성화가 일어날 수 있다고 강조하면서, 낭종 내벽의 조직이 담도상피 혹은 미분화 상피인 경우에는 총담관류의 완전절제를 권고하였다.

총담관류 환자의 약 48%에서 담낭절제술의 병력과 30%에서 원인미상의 췌장염 병력이 있다고 보고되었다[2]. 따라서 원인미상의 췌담도계 질환, 담낭절제술 후 빈발하는 복통 또는 반복적인 비특이적 소화기증상이 있는 경우에는 총담관류를 의심할 수 있다. 십이지장경 검사에서 십이지장 유두부를 세심하게 관찰하여 총담관류가 의심될 때에는, 내시경역행췌담관조영술 및 내시경초음파 등의 적극적인 검사가 필요할 것으로 생각된다.

## REFERENCES

1. Todani T, Watanabe Y, Toki A, Morotomi Y. Classification of congenital biliary cystic disease: special reference to type Ic and IVA cysts with primary ductal stricture. *J Hepatobiliary Pancreat Surg* 2003;10:340-4.
2. Sarris GE, Tsang D. Choledochocoele: case report, literature review, and a proposed classification. *Surgery* 1989;105:408-14.
3. Law R, Topazian M. Diagnosis and treatment of choledochocoeles. *Clin Gastroenterol Hepatol* 2014;12:196-203.
4. Yamaguchi M. Congenital choledochal cyst. Analysis of 1,433 patients in the Japanese literature. *Am J Surg* 1980;140:653-7.
5. Kim JH, Kang DH, Park HC, Park JJ, Kim SS, Kim YK, et al. Four cases of choledochocoele diagnosed by endoscopic retrograde cholangio-pancreatography (ERCP) and treated with endoscopic sphincterotomy (EST). *Korean J Gastrointest Endosc* 1997;17:211-9. Korean.
6. Chang TS, Kim DK, Youn KH, Lee DS. Idiopathic dilatation of the common bile duct. *Kyungpook Univ Med J* 1966;7:267-75. Korean.
7. Venu RP, Geenen JE, Hogan WJ, Dodds WJ, Wilson SW, Stewart ET, et al. Role of endoscopic retrograde cholangio-pancreatography in the diagnosis and treatment of choledochocoele. *Gastroenterology* 1984;87:1144-9.

8. Sterling JA. Diverticula in the terminal portion of the common bile duct. *Am J Pathol* 1949;25:325-37.
9. Scholz FJ, Carrera GF, Larsen CR. The choledochocele: correlation of radiological, clinical and pathological findings. *Radiology* 1976;118:25-8.
10. Masetti R, Antinori A, Coppola R, Coco C, Mattana C, Crucitti A, et al. Choledochocele: changing trends in diagnosis and management. *Surg Today* 1996;26:281-5.
11. Yamaoka K, Tazawa J, Koizumi K, Asahina Y, Tajiri K, Tsubaki M, et al. Choledochocele with obstructive jaundice: a case report and a review of the Japanese literature. *J Gastroenterol* 1994;29:661-4.
12. Ohtsuka T, Inoue K, Ohuchida J, Nabae T, Takahata S, Niiyama H, et al. Carcinoma arising in choledochocele. *Endoscopy* 2001;33:614-9.
13. Bismuth H, Krissat J. Choledochal cystic malignancies. *Ann Oncol* 1999;10(Suppl 4):94-8.
14. Horaguchi J, Fujita N, Kobayashi G, Noda Y, Ito K, Takasawa O. Clinical study of choledochocele: is it a risk factor for biliary malignancies? *J Gastroenterol* 2005;40:396-401.
15. Sacher VY, Davis JS, Sleeman D, Casillas J. Role of magnetic resonance cholangiopancreatography in diagnosing choledochal cysts: case series and review. *World J Radiol* 2013;5:304-12.
16. Avunduk C, Weiss R, Hampf F, Navab F. Obstructing choledochocele: diagnosis by endoscopic ultrasound. *Abdom Imaging* 1995;20:72-4.
17. Lee JK. An endoscopic observation of the duodenal papilla. *Korean J Gastrointest Endosc* 2003;27(Suppl 1):171-5. Korean.
18. Finch PJ, Haddock J, Grundy A. Duodenal pseudotumour: a silent impacted common bile duct calculus. *Postgrad Med J* 1989;65:794-6.
19. Berger A, Douard R, Landi B, Poupardin E, Canard JM, Cellier C, et al. Endoscopic management of a large choledochocele associated with choledocholithiasis. *Gastroenterol Clin Biol* 2007;31:200-3.
20. Schimpl G, Sauer H, Goriupp U, Becker H. Choledochocele: importance of histological evaluation. *J Pediatr Surg* 1993;28:1562-5.